



TITLE:

先天性膀胱腔瘻の1例

AUTHOR(S):

伊藤, 哲二; 岩井, 謙仁; 仲谷, 達也; 大山, 武司; 寺田, 隆久; 江崎, 和芳

CITATION:

伊藤, 哲二 ...[et al]. 先天性膀胱腔瘻の1例. 泌尿器科紀要 1985, 31(5): 839-844

ISSUE DATE:

1985-05

URL:

<http://hdl.handle.net/2433/118485>

RIGHT:

先天性膀胱膣瘻の1例

市立吹田市民病院泌尿器科

伊藤 哲二・岩井 謙仁

仲谷 達也・大山 武司

大阪市立大学医学部泌尿器科学教室（主任：前川正信教授）

寺田 隆久・江崎 和芳

A CASE OF CONGENITAL VESICOVAGINAL FISTULA

Tetsuji Ito, Kenji IWAI, Tatsuya NAKATANI and Takeshi OYAMA

From the Department of Urology, Suita City Hospital

Takahisa TERADA and Kazuyoshi EZAKI

*From the Department of Urology, Osaka City University Medical School**(Director: Prof. M. Maekawa)*

Congenital vesicovaginal fistula is very rare and only five cases have been reported so far. This is a report on a case of congenital vesicovaginal fistula in a three-year-old girl.

Vesicovaginal fistula was confirmed by cystoscopy and colposcopy. Roentgen examinations, including IVP, CG and CT revealed a left hypoplastic kidney, left ectopic ureteric orifice and left vesicoureteral reflux. Under general anesthesia, the fistula was resected and closed transvesically, and ureterocystostomy was performed.

Five out of the six cases of congenital vesicovaginal fistula reported worldwide had other congenital complications of the genitourinary system, but the etiology of this anomaly is still unknown.

Key words: Congenital vesicovaginal fistula, Ectopic ureteric orifice, Vesicoureteral reflux, Hypoplastic kidney

緒 言

幼小児の膀胱膣瘻の多くは、外傷性あるいは医原性であって¹⁻⁴⁾、先天性のものは少なく今日まで5例の報告を見るにすぎない⁵⁻⁹⁾。

今回われわれは生来尿失禁があり、諸検査の結果先天性膀胱膣瘻と診断された症例を経験したので、その概要とともに若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：I.S. 4歳、女子

初診：1982年12月28日

主訴：尿失禁

既往歴：特記すべきことなし、正常分娩、生下時体重 3,360 g、身長 50 cm

家族歴：特記すべきことなし

現病歴：生来尿失禁がありおむつをはずすことができず、腎盂腎炎をくりかえし、そのつど近医にて治療を受けていた。1981年春頃より膀胱炎症状が出現し、当院小児科にて通院治療を受けていたが、1982年12月に再び高熱をきたし、精査目的にて同科に入院した。入院後の排泄性腎盂造影にて左腎が造影されず、また尿失禁の精査を希望して当科に転科となった。

現症：体格中等度、栄養状態は良好で、身体的発育および精神的発達に異常を認めない。腹部触診上、双手診にて右腎を触知するが、左腎は触知されず、外陰部は軽度の発赤、びらんを呈し、膣よりの尿流出を認めた。またカテーテルにより膀胱内ヘインジゴカルミン液を注入したところ、膣よりの流出を認めた。

入院時検査成績：血液像：赤血球数 $557 \times 10^4/\text{mm}^3$

Hb 14.9 g/dl, Ht 値 47.8%, 白血球数 8,600/mm³, 血小板数 37.2×10^4 /mm³, 総蛋白 6.7 g/dl, アルブミン 3.9 g/dl, GOT 35 IU, GPT 20 IU, ALP 22.5 KA-U, LDH 49.5 IU, Na 143 mEq/L, K 4.0 mEq/L, Cl 109 mEq/L, BUN 19 mg/dl, Cr 0.5 mg/dl, CRP (-).

尿所見：黄色透明, PH 6.0, 蛋白 (-), 潜血 (-) 赤血球 0-1/hpf, 白血球 2-3/hpf, 上皮細胞 0-1/hpf, 細菌 (-).

膀胱鏡所見：膀胱粘膜は軽度浮腫状を呈し, 膀胱頸部に瘻孔および左尿管口を認め, 三角部左側の形成を認めない. なお右の尿管口は正常であった. また同時に施行した腔鏡で腔前壁に瘻孔を認め, それより挿入した尿管カテーテルの先端部を膀胱鏡にて確認した.

レ線所見：胸部および腎膀胱部単純レ線に異常陰影を認めなかった. IVP では, (Fig. 1) 右腎の形態および造影剤の排泄は正常であるが, 左腎は造影されなかった. また腎シンチグラムでは (Fig. 2) 右腎は正常であったが, 左腎にはごく小さい集積像を認めるだけであった. 腔造影では Fig. 3 に示すごとく腔前壁より膀胱に達する約 2 cm の瘻孔を認めた. 膀胱造影では (Fig. 4) 左尿管腎盂に造影剤の逆流を認め, 左腎は腎盂腎杯の変形ならびに萎縮が著明であった.

以上により先天性膀胱瘻, 左形成不全腎 (疑), 左尿管異所開口, 左膀胱尿管逆流現象と診断し, 全身麻酔下にて1983年3月14日手術を施行した.

手術所見：下腹部正中切開にて後腹膜腔に達し膀胱前壁に縦切開を加え, 膀胱頸部に瘻孔ならびに左尿管口を確認した. Fig. 5, 6 にその術中写真を示すが, Fig 5 の左外側へのびている下の尿管カテーテルは,

左尿管に挿入したものであり, 先端がのぞいている上の尿管カテーテルは, Fig. 6 の腔側瘻孔より挿入したものである. 瘻孔, 左尿管は交叉した状態でありそれぞれの開口部の距離は約 5 mm であった.

その後瘻孔を切除し, 膀胱粘膜層と筋層の2層に縫合した. なお左尿管下端を切断した後, 膀胱尿管新吻合術を施行し手術を終えた.

Fig. 7 は瘻孔組織の HE 染色の弱拡大像であるが, 粘膜は主として扁平上皮よりなり, 間質には膠原線維の増加, リンパ球の浸潤を認め軽い炎症像を呈していた.

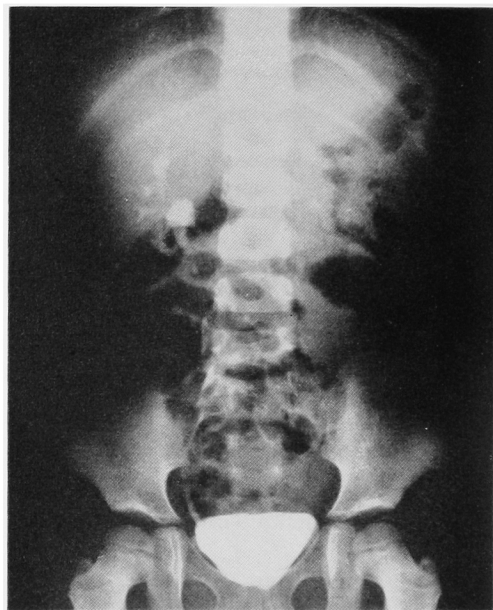


Fig. 1. IVP 20分像・右腎は正常であるが左腎は造影されていない

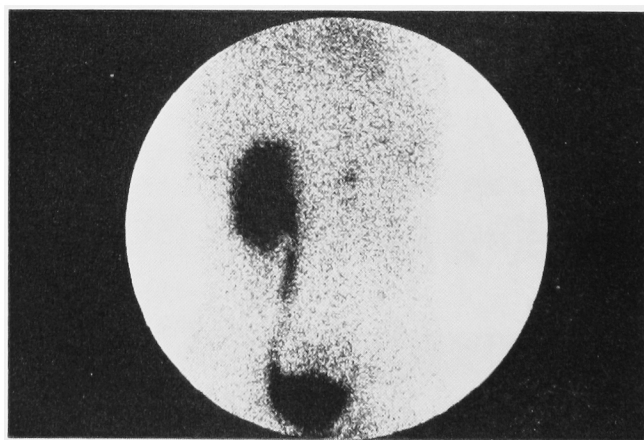


Fig. 2. 腎シンチグラム：右腎は正常であるが左腎はごく小さい集積を認めるだけである

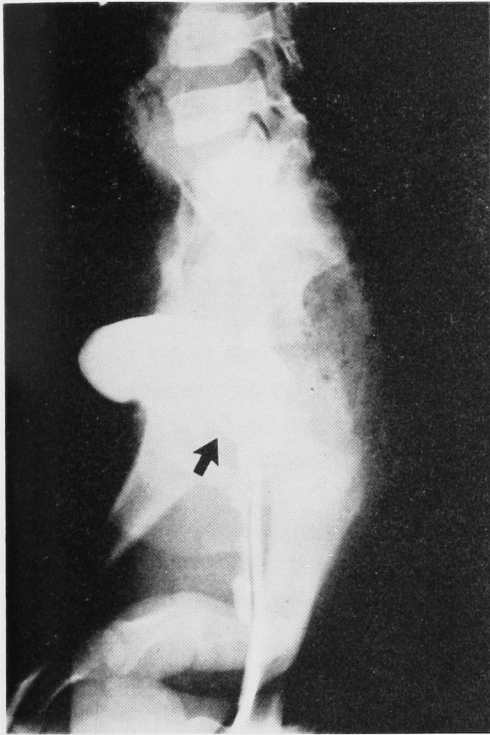


Fig. 3. 腔造影像：矢印に示すごとく臍前壁より膀胱に達する約 2 cm の瘻孔が認められる

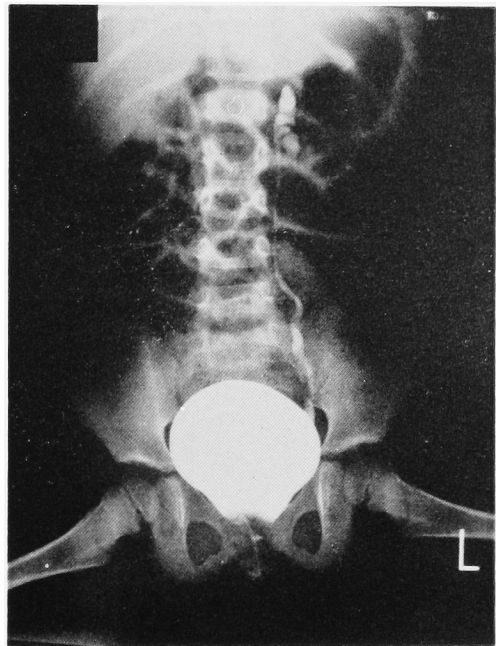


Fig. 4. 膀胱造影像：左膀胱尿管逆流現象を認める

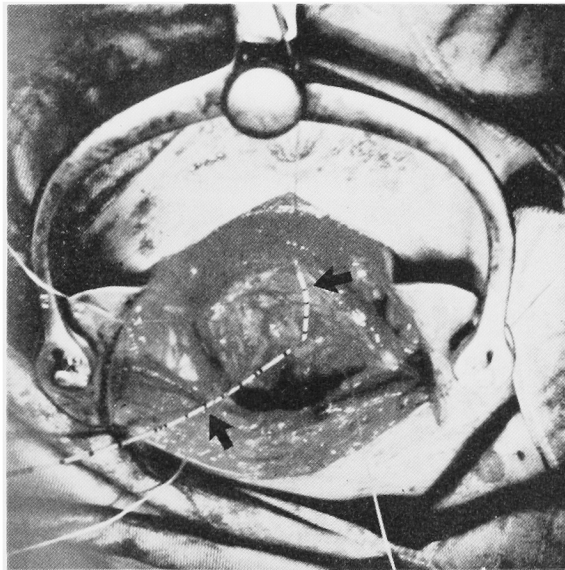


Fig. 5. 術中写真：矢印で示した左外側へのびている尿管カテーテルは左尿管へ挿入したものであり先端を矢印で示した上の尿管カテーテルは腔側瘻孔より挿入した尿管カテーテルである

術後経過：患者は術後2日目より強度の膀胱けいれんを繰返し、5日目にバルーンカテーテルの抜去を余儀なくされた。その後膀胱けいれんは沈静傾向であったが、2週間目よりふたたび膣よりの尿流出が認められた。膣鏡をおこなったところ今回の手術対象となった瘻孔よりの漏尿はなく、膣前壁上部に新しい瘻孔の存在が確認された。以後1984年1月にふたたび膀胱瘻閉鎖術を施行し、以後の術後経過は良好で現在膀胱瘻容量も100 ml 以上となり漏尿もなく、外来にて経過観察中である。



Fig. 6. 術中写真：矢印で示した尿管カテーテルは膣壁より瘻孔を通じて膀胱へ挿入した尿管カテーテルである

考 察

幼小児の膀胱瘻はまれな疾患であり、そのほとんどは医原性、外傷性に起因するといわれている。Persky¹⁾は6例の幼小児の膀胱瘻について報告し、その原因として医原性によるものが5例、外傷性によるものが1例であったと述べ、TUR-bnの術後や膣、膀胱の手術に起因したものがほとんどであるとしている。同様の報告をSmith¹⁰⁾、高松ら¹¹⁾もおこなっているが、先天性膀胱瘻はきわめてまれな疾患であると述べている。

先天性膀胱瘻は著者の調べたところでは、Table 1 に示すごとく1939年のWeber and Scholtzの報告以来5例を認めるにすぎず⁸⁻⁹⁾、自験例は本邦第1例目と思われる。

その年齢は第1例目のWeber and Scholtzの出生直後の剖検例を除くと4歳から22歳までであった。主訴は尿失禁が5例中3例であり、また2例目、4例目のごとく下腹部腫瘤、月経期血尿など婦人科的主訴で発見される場合もある。

先天性膀胱瘻の原因については、詳細は不明であるが、Suarez and Burden⁹⁾は尿管芽細胞の発生異常、すなわち尿管芽の異常分枝（これが造後腎組織と接触すれば重複腎盂尿管になるが）が尿生殖洞から発生する洞嚢球に接触してできるのではないかと述べている。

合併奇形としては自験例を含め6例中5例になんらかの合併奇形を認め、尿路系合併奇形としては腎無発生、腎形成不全、あるいは尿管異所開口を4例にみとめ、生殖器系合併奇形としては膣閉鎖症、子宮欠損あ

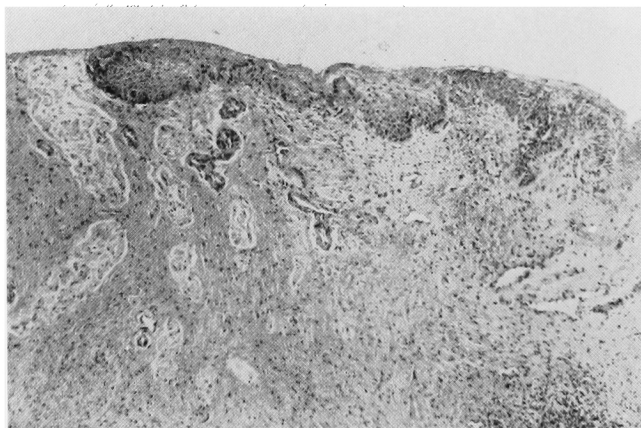


Fig. 7. 瘻孔組織のHE染色弱拡大像：粘膜は主として扁平上皮よりなり間質には膠原線維の増加、リンパ球の浸潤を認める

Table 1. 先天性膀胱腔瘻報告例

| 報告者 | 年代 | 年齢 | 主 訴 | 合併奇形 | 備考 |
|-------------|------|----|--------|------------------------|----|
| 1 Weber・ほか | 1939 | 0 | | 処女膜閉鎖 多指症 | 剖検 |
| 2 Swinney | 1951 | 13 | 持続性尿失禁 | 左腎無発生 | |
| 3 Smith・ほか | 1971 | 22 | 下腹部腫瘍 | 左腎無発生 子宮欠損症 腔閉鎖症 | |
| 4 Verhoever | 1973 | 21 | 月経期血尿 | 右腎形成不全 腔閉鎖症 | |
| 5 Suarez・ほか | 1982 | 4 | 持続性尿失禁 | な し | |
| 6 自 験 例 | 1984 | 4 | 持続性尿失禁 | 左尿管異所開口 左腎形成不全(?) | |

るいは処女膜閉鎖などであり、その他の合併奇形としては多指症などが報告されている。

合併奇形が多い原因としては、Smith and Goodwin は婦人科的 立場より、泌尿器系と生殖器系の発生原器が近接しているために子宮や膈の発生異常に尿路系の合併奇形が多いのではないかと推測している。また Marshall ら¹²⁾ もこの考えを支持し、診断のために注意深い尿路系ならびに生殖器系の検索が必要であると述べている。

自験例は左腎が非常に小さく、その原因は不明であるが、左膀胱尿管逆流現象が存在していたことから、たび重なる腎盂腎炎また水腎症の結果としての萎縮腎と考えることもできる。いっぽう沼里ら¹³⁾は尿管異所開口に合併する腎の異常として發育不全腎、患側腎欠損、骨盤腎、回転異常、交叉性腎変位などを報告し、そのなかでも腎形成不全が78.6%と高率に合併していると述べている。また尿管異所開口は尿管の Wolff 氏管からの独立開口および膀胱形成過程の障害により生ずると考えられているが、Mackie and Stephens¹⁴⁾は尿管芽の分岐する点が正常の位置より上方または下方に偏位すればするほど造後腎組織と尿管芽の接触が適正におこなわれず、その結果腎形成異常に至ると推測している。

以上のことを考え合わせると、自験例では尿管異所開口を合併していることから、形成不全腎と考えることが妥当であると思われる。

治療法に関しては通常の膀胱腔瘻に準ずると考えられるが、合併奇形が多いことから、それぞれの治療をもおこなう必要があり、瘻孔の存在部位によっては手術を困難にすることも多いと考えられる。

自験例では第1回目の手術後ふたたび膈よりの尿流出を認めたが、瘻孔が膀胱頸部より尿道括約筋近傍に存在していたこと、また術後5日目において頻発する

膀胱けいれんのためにバルーンカテーテルの抜去を余儀なくされたことなどがその原因となっていると考えられる。

結 語

左尿管異所開口および左形成不全腎(疑)をともなった4歳、女子の先天性膀胱腔瘻を経験したので、その概要を報告するとともに 若干の文献的考察をおこなった。なお本例は本邦第1例目と考えられる。

稿を終るにあたり、御校閲を賜った恩師前川正信教授に感謝いたします。なお本論文の要旨は、第10回日本泌尿器科学会沖縄地方会において発表した。

文 献

- 1) Persky L, Forsythe WE and Herman G : Vesicovaginal fistula in childhood. Urol 15: 36~39, 1980
- 2) Tahzib F : Epidemiological determinants of vesicovaginal fistula. Brit J Obstet Gynaecol 80: 387~391, 1983
- 3) Goodwin WE and Scardino PT : Vesicovaginal and ureterovaginal fistulas. A summary of 25 years of experience. Transact Amer Associ Genito-Urinary Surgeons 71:123~129, 1979
- 4) 岡島英五郎・平尾佳彦・小原壮一：膀胱腔瘻閉鎖術。臨泌 37: 499~507, 1983
- 5) Weber FP and Scholtz M : Congenital vesicovaginal fistula with imperforate hymen, hydrops fetalis and erythroblastosis, polydactyly. Brit J Child Dis 30 : 131~133, 1939
- 6) Swinney J: A case of congenital vesicovagi-

- nal fistula. Brit J Urol **23** : 64~65, 1951
- 7) Smith RB and Goodwin WE Congenital hydrocolpos and associated urogenital malformations. Report of a case with solitary kidney and congenital vesicovaginal fistula. J Urol **105**: 683~686, 1971
- 8) Verhoever ATM: Primary menouria due to congenital vesicovaginal fistula. Obstetrics and Gynecology **41**: 515~520, 1973
- 9) Suares GM and Burden JJ: Isolated congenital vesicovaginal fistula. J Urol **129**: 368~370, 1983
- 10) Smith DR: Critique on the concept of vesical neck obstruction in children. JAMA **207** : 1686~1693, 1972
- 11) 高松恒夫・寺島光行・兼田達夫・小柳知彦: 残存尿管から発生した膀胱陰嚢の1例. 臨泌 **31** : 919~924, 1977
- 12) Marshall FF, Jeffs RD and Sarafyan WK : Urogenital sinus abnormalities in the female patient. J Urol **122**: 568~572, 1979
- 13) 沼里 進・佐々木秀平・久保 隆・大堀 勉: 発育不全腎を伴った尿管異常開口の1例—本邦尿管異常開口352例についての統計的観察. 泌尿紀要 **18** : 794~801, 1972
- 14) Mackie GG and Stephens FD : Duplex kidneys. A correlation of renal dysplasia with position of ureter orifice. J Urol **114** : 274~280, 1975

(1984年10月2日受付)